

Title	馬蹄鉄腎より発生した腎カルチノイド腫瘍の1例
Author(s)	庵地, 孝嗣; 田村, 賢司; 井上, 啓史; 蘆田, 真吾; 山崎, 一郎; 竹内, 保; 執印, 太郎
Citation	泌尿器科紀要 (2009), 55(6): 327-330
Issue Date	2009-06
URL	http://hdl.handle.net/2433/79912
Right	許諾条件により本文は2010-07-01に公開
Type	Departmental Bulletin Paper
Textversion	publisher

馬蹄鉄腎より発生した腎カルチノイド腫瘍の1例

庵地 孝嗣¹, 田村 賢司¹, 井上 啓史¹, 蘆田 真吾¹
山崎 一郎¹, 竹内 保², 執印 太郎¹

¹高知大学医学部泌尿器科学教室, ²高知大学医学部病理診断部

A CASE OF CARCINOID TUMOR ARISING FROM A HORSESHOE KIDNEY

Takashi ANCHI¹, Kenji TAMURA¹, Keiji INOUE¹, Shingo ASHIDA¹,
Ichiro YAMASAKI¹, Tamotsu TAKEUCHI² and Taro SHUIN¹

¹The Department of Urology, Kochi Medical School, Kochi University

²The Department of Tumor Pathology, Kochi Medical School, Kochi University

Carcinoid tumor of the kidney is an extremely rare neoplasm. We report a case of primary carcinoid tumor arising from a horseshoe kidney in a 31-year-old man. An abdominal bulky mass was found at a local hospital and he was referred to our hospital for examination and treatment. From the results of computed tomography, magnetic resonance imaging and angiography, we suspected renal tumor arising from a horseshoe kidney and performed left partial nephrectomy with isthmectomy. Pathological findings of hematoxylin eosin staining revealed tumor cells proliferating in a cord-like and ribbon-like structure and the tumor cells stained strongly for chromogranin A, grimalius and neuron specific enolase. According to these findings, we diagnosed carcinoid tumor arising from a horseshoe kidney.

(Hinyokika Kiyo 55 : 327-330, 2009)

Key words : Carcinoid tumor, Horseshoe kidney

緒 言

カルチノイド腫瘍は主に消化管や肺・気管支に発生することが多く、腎に発生することは稀ではあるが、馬蹄鉄腎においてはカルチノイド腫瘍が発生する危険性が高いといわれている。

今回われわれは馬蹄鉄腎に随伴した腎カルチノイド腫瘍の1例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 31歳, 男性

主訴 : 左腹部腫瘍

既往歴 : 特記事項なし

家族歴 : 祖母に悪性腫瘍 (詳細不明)

現病歴 : 2004年3月13日, 左腹部腫瘍を主訴に近医を受診。腹部巨大腫瘍を指摘され, 16日精査加療目的に当科紹介となり, 25日入院となった。

入院時現症 : 身長 164.8 cm, 体重 51.5 kg, 意識清明, 心拍数84拍/分, 血圧 = 130/84 mmHg。左腹部に可動性のない, 硬い小児頭大の腫瘍を触知した。

血液検査所見 : RBC $488 \times 10^4/\mu\text{l}$, Ht 45.8%, Hb 16.1 g/dl, Plt $22.4 \times 10^4/\mu\text{l}$, WBC $3,200/\mu\text{l}$, TP 6.4 g/dl, Glu 102 mg/dl, Alb 4.4 g/dl, T-Bil 0.5 mg/dl, ALP 189 IU/l, γ GPT 77 IU/l, ChE 214 IU/l, GPT 24 IU/l, GOT 22 IU/l, LDH 147 IU/l, BUN 12.0 mg/dl,

dl, CRN 0.7 mg/dl, Na 141 mEq/l, K 4.0 mEq/l, Cl 104 mEq/l, Ca 8.4 mg/dl, CEA 0.9 ng/ml, NSE 7.5 ng/ml, IAP $3.6 \mu\text{g/ml}$, AFP 1.6 ng/ml, CA19-9 5.3 U/ml, SCC <0.50 ng/ml

明らかな異常所見は認めなかった。

画像所見 : 腹部 CT では, 馬蹄鉄腎の左腎中央腹側に石灰化と嚢胞を伴った造影効果の弱い長径 16 cm の充実性腫瘍を認めた (Fig. 1a, 1b)。MRI でも同様の所見を認めた。血管造影では馬蹄鉄腎に流入する動脈を5本認め, そのうちの2本が腫瘍に流入されていたが, いずれも造影効果は弱かった (Fig. 2a, 2b)。

治療経過 : 画像所見から, 馬蹄鉄腎から発生した腎腫瘍と診断し, 4月22日左腎部分切除術ならびに馬蹄鉄腎峡部離断術を施行した。手術時間は305分, 出血量は750 mlであった。腫瘍と周辺臓器 (脾臓, 膀胱, 腸管など) との癒着などは認めなかった。

肉眼所見 : 摘出標本は $18 \times 18 \times 8 \text{ cm}$, 重量は 1.1 kg であった。表面は平滑, 断面は赤褐色調で, 嚢胞を伴った充実性の腫瘍であった (Fig. 3)。

病理組織所見 : HE 染色では核異型度の低い形の揃った核を持つ円形の腫瘍細胞が索状, リボン状, またはシート状に増殖していた (Fig. 4a)。

免疫組織染色では chromogranin A, grimalius, NSE の強陽性像を認め, カルチノイド腫瘍に特徴的な所見と考えられた (Fig. 4b, 4c)。鑑別疾患として endo-



a



b

Fig. 1. Abdominal enhanced CT scan showed a left renal tumor (a) arising from horseshoe kidney (b).

crine cell carcinoma が挙げられたが、これは Ki-67 の陽性率が1%前後と低いことにより否定された。

以上より馬蹄鉄腎に随伴した腎カルチノイド腫瘍と診断した。術後の経過は良好で5月22日退院となり、術後4年3カ月経過しているが、再発なく外来経過観察中である。

考 察

カルチノイド腫瘍は1907年 Oberndorfer ら¹⁾によって消化管原発腫瘍として初めて報告された。カルチノイド腫瘍は神経内分泌細胞である Kultschitsky 細胞から発生すると考えられている。カルチノイド腫瘍はセロトニン、ブラジキニン、ヒスタミン、プロスタグランジンなどのホルモン様物質を産生し、これらの物質の量が過剰になるとカルチノイド症候群を引き起こすと考えられている。カルチノイド症候群の主な症状は顔面から頸部の紅潮、下痢、心臓弁障害、気管支喘息様発作などである。

Soga ら²⁾は1,342例の統計分析により、カルチノイド腫瘍の原発部位は消化器系が68.0%、呼吸器系が26.2%と大多数を占め、その他は5.8%とされ、泌尿



a



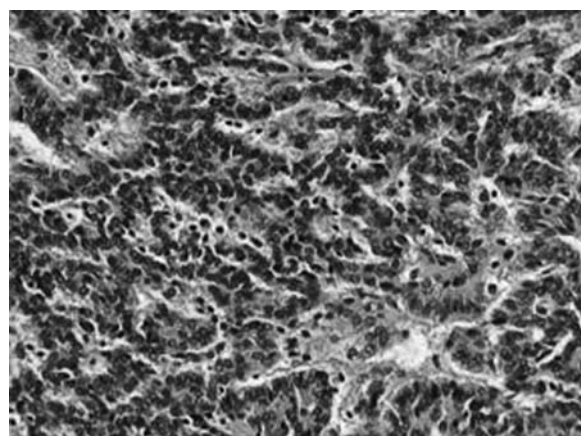
b

Fig. 2. Renal arteriography showed that two arteries feed the tumor, which was a hypovascular tumor on the left side of the horseshoe kidney. (a) One of the arteries flowed from the upper site of the tumor. (b) The other flowed from the lower site of the tumor.

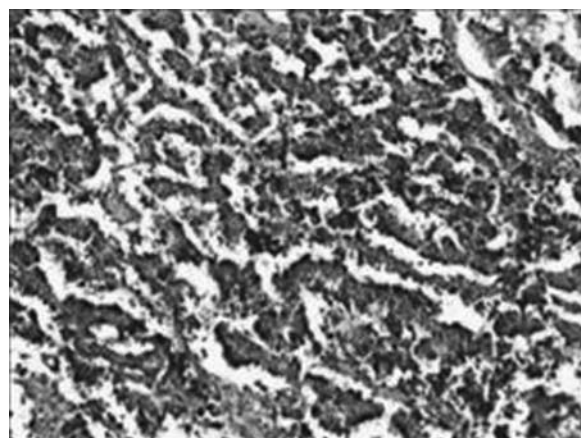


Fig. 3. Macroscopically, the cut surface is red-brown and solid with cyst.

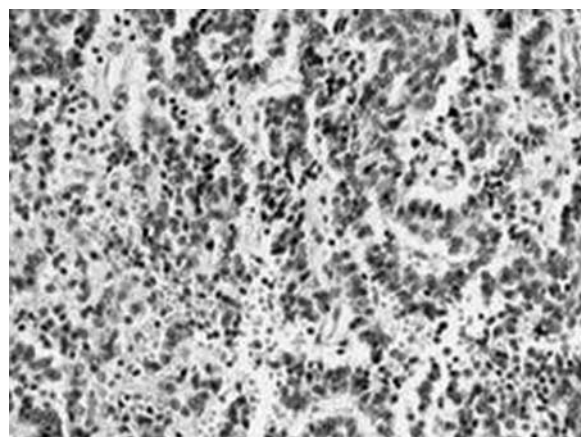
器領域の臓器を原発とするカルチノイド腫瘍は非常に稀である。今回われわれが調べた限りでは腎原発のカルチノイド腫瘍は自験例を含め世界で42例の報告例があるのみであった。これらの報告および自験例をまとめると平均発症年齢44.9 (13~79) 歳で、性差は認め



a: HE ×200



b: Grimelius ×200



c: Chromogranin A ×200

Fig. 4. The histological and immunohistochemical examination of the specimen. (a) Tumor was composed of round or columnar cells proliferating in a cord-like and ribbon-like structure, reduced from ×200. (b) The tumor cells were positive for anti-grimelius with a diffuse cytoplasmic pattern, reduced from ×200. (c) The tumor cells were positive for anti-chromogranin A with a diffuse cytoplasmic pattern, reduced from ×200.

ていない。主な臨床症状として、腹部腫瘍、疼痛、血尿などがあり、8例にカルチノイド症候群を認めていた。また自験例を含め12例が馬蹄鉄腎に随伴してお

り、Krishnan ら³⁾は馬蹄鉄腎からの発生の危険性は正常腎の62倍であると報告している。カルチノイド原発腫瘍からの転移は10～45%で、原発巣の大きさに相関すると報告がある。主な転移部位はリンパ節、肝臓、骨である^{2,4)}。

術前に腎カルチノイド腫瘍と診断できた症例はなく、全例腎腫瘍との診断で根治的腎摘出術を受けている。42例中転移を認めた10例のうち4例が死亡したと報告されているが、残りの6例は2～7.5年経過し、生存している。また馬蹄鉄腎に随伴したカルチノイド腫瘍12例中3例で遠隔転移を認めているが、死亡例の報告はない⁵⁻⁷⁾。

病理組織所見としては、腫瘍細胞の核は多形性に乏しく比較的粒揃いで、分裂像は少ない。胞体はHE染色で好酸性に染まり、免疫組織染色で血管間質側がgrimeliusやchromogranin Aで陽性を示す⁸⁾。また内分泌顆粒が小型で少数の場合には、chromogranin Aが陰性になりやすいが、NSEは内分泌顆粒の有無に関わらず陽性を示す⁹⁾。Endocrine cell carcinomaとの鑑別として、カルチノイド腫瘍では細胞増殖能が一般に低く、Ki-67の陽性細胞率が0.4%前後であるのに対し、endocrine cell carcinomaでは20～50%と高いことが鑑別に有用であると岩渕らは報告している⁹⁾。

Legha ら¹⁰⁾は消化管からの転移性カルチノイド32例に対しての化学療法の成績を検討している。その報告によると部分寛回が7例に認められ、このうち5例はアドリアシン単独または他剤との併用例であったことから転移性カルチノイドに対するアドリアシンの有効性が注目されている。また術後補助療法として消化管原発のカルチノイド腫瘍の肝転移に対しては、インターフェロン α 、インターフェロン γ 、ソマトスタチンアナログの有効性も報告されている¹¹⁻¹³⁾。Isobe ら¹⁴⁾は、リンパ節陽性症例に対して、後療法にインターフェロン γ を2カ月間投与し、その後3年間の観察期間中に局所再発や遠隔転移を認めなかったと報告している。またIsobe らは転移巣を認めたとしても、外科的に完全切除することができれば、再発期間の延長が期待できるのではないかと考えている。

またChakravarthy ら¹⁵⁾は肺からの転移性カルチノイド腫瘍18例、31部位に対しての放射線療法の成績を検討しており、根治はできなかったものの、24部位で患者が死亡するまでの間自覚症状の消失、あるいは腫瘍の増大を防ぐことができたと報告している。

自験例においては、外科的に完全切除を行えたと考え、術後の後療法は行っていない。現在術後4年3カ月経過しているが、局所再発や遠隔転移は認めていない。今後も引き続き厳重に経過観察を続けていく予定である。

結 語

馬蹄鉄腎に合併した腎カルチノイド腫瘍の1例を文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Oberndorfer S: Karzinoide tumoren des dunndarms. Frankfurt Z Path **1**: 426-432, 1907
- 2) Soga J: Carcinoid tumor in Japan (statistical analysis of 1,342 cases). Geka **48**: 1397-1409, 1986
- 3) Krishnan B, Truong LD, Sirbasku DM, et al.: Horseshoe kidney is associated with an increased relative risk of primary renal carcinoid tumor. J Urol **157**: 2059-2066, 1997
- 4) Kawajiri H, Onoda N, Ohira M, et al.: Carcinoid tumor of the kidney presenting as a large abdominal mass: report of a case. Surg Today **34**: 86-89, 2004
- 5) McVey RJ, Banerjee SS, Eyden BP, et al.: Carcinoid tumor originating in a horseshoe kidney. In Vivo **16**: 197-199, 2002
- 6) Rodríguez-Covarrubias F, Gómez X and Valerio JC: Carcinoid tumor arising in a horseshoe kidney. Int Urol Nephrol **39**: 373-376, 2007
- 7) Bhalla R, Popp A and Nassar A: Case report: metastatic renal carcinoid to the thyroid diagnosed by fine needle aspiration biopsy. Diagn Cytopathol **35**: 597-600, 2007
- 8) 松山睦司, 佐竹立成: 泌尿器に発生する神経内分泌腫瘍. 病理と臨 **17**: 1274-1278, 1999
- 9) 岩渕三哉, 渡辺 徹, 草間文子: 大腸疾患診療の実際—大腸内分泌細胞腫瘍—カルチノイド腫瘍と内分泌細胞癌. 外科治療 **91**: 49-58, 2004
- 10) Lehga SS, Valdivieso M and Bodey GP: Chemotherapy for metastatic carcinoid tumors. experiences with 32 patients and a review of the literature. Cancer Treat Rep **61**: 1699-1703, 1977
- 11) Di Bratolomeo M, Bjetta E, Züembo N, et al.: Treatment of carcinoid syndrome with recombinant interferon alpha-2a. Acta Oncol **32**: 235-238, 1993
- 12) Janson ET, Kauppinen HL and Oberg K: Combined alpha- and gamma-interferon therapy for malignant midgut carcinoid. Acta Oncol **32**: 231-233, 1993
- 13) Saltz S, Kemeny N, Schwartz G, et al.: A phase II trial of alpha-interferon and 5-fluorouracil in patients with advanced carcinoid and islet cell tumors. Cancer **74**: 958-961, 1994
- 14) Isobe H, Takashima H, Higashi N, et al.: Primary carcinoid tumor in a horseshoe kidney. Int J Urol **7**: 184-188, 2000
- 15) Chakravarthy A and Abrams RA: Radiation therapy in the management of a patient with malignant carcinoid tumors. Cancer **75**: 1386-1390, 1995

(Received on December 22, 2008)

(Accepted on February 6, 2009)